

이하선에 발생한 만성 타액선 도관염 : 증례보고

김범준¹⁾, 김현우¹⁾, 김진²⁾, 박광호¹⁾, 김형준^{1)*}

연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실¹⁾, 연세대학교 치과대학 구강병리학교실²⁾

〈ABSTRACT〉

Chronic Sialodochitis in Parotid Gland : case report

Bum Joon Kim¹⁾, Hyun Woo Kim¹⁾, Jin Kim²⁾, Kwang Ho Park¹⁾, Hyung Jun Kim^{1)*}

Department of Oral and Maxillofacial Surgery¹⁾, Department of Oral Pathology²⁾,
College of Dentistry, Yonsei University

Sialodochitis is an inflammatory disease on salivary gland duct. Although most of sialoadenitis includes inflammatory status of ductal system, an unusual behavior such as localized inflammation only in the duct is rarely observed. Sialodochitis is a very rare disease that was first reported by Kussmaul in 1879.¹⁾ Common symptoms of chronic sialodochitis are an excretion of mucous plugs and a swelling of the cheek. Sialodochitis may be associated with a type I hypersensitivity in the salivary duct and parotid gland, because of the large amount of eosinophils in saliva, and the common allergic history such as bronchial asthma and allergic rhinitis. The management of sialodochitis depends on the severity of disease. The surgical procedure such as drainage operation, sialodochoplasty, or superficial parotidectomy can be selected. We report the case of chronic sialodochitis with literature review.

Key words : Parotid gland, Chronic sialodochitis, Non-allergic hypersensitivity

I. 서론

타액선 도관염(Sialodochitis)은 타액선의 도관에 나타나는 염증상의 질환이다. 대개 이하선 선조직의 염증과 도관의 염증이 동반되어 나타나는 경우가 많으므로 타액선염(Sialoadenitis)이라는 포괄적인 용어로 명명하지만, 특이하게 타액선 도관에만 염증상을 보이는 경우가 있다.

이하선의 타액선 도관염(Sialodochitis)은 1879년 Kussmaul¹⁾에 의하여 처음 보고된 이후, 매우 드물게 보

고되고 있다. 이 질환의 임상적인 특징은 이하선이 붓고 섬유소성 플러그와 점액들이 배출되는 것이다. 이환된 환자들의 타액에서 많은 양의 호산성 백혈구가 발견되고 공통적으로 천식이나 비염 등의 알러지 질환을 가지고 있었기 때문에, 타액선 도관과 타액선에서 발생하는 1형 과민반응이 타액선 도관염(Sialodochitis)의 원인일 것이라고 생각된다²⁾.

효과적인 치료법은 정립되어 있지 않지만, 질환의 심각한 정도에 따라서 배액 유도술(Drainage operation), 타액선 도관 성형술(Sialodochoplasty), 이하선 천엽 절제술(Superficial parotidectomy) 등을 선택하여 치료한다.

저자는 타액선 도관에만 염증상을 보인 만성 타액선 도관염(Chronic sialodochitis)의 증례를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

* Correspondence : Hyung Jun Kim, Dept. of Oral and Maxillofacial Surgery College of Dentistry, Yonsei University 250 Seongsanno, Seodaemoon Gu, Seoul, Korea Tel: 82-2-2228-3132, Fax: 82-2-2227-8022
E-mail: kimoms@yuhs.ac

Table 1. Salivary flow test

	Patient value (ml/min)	Normal value (ml/min)
Non-stimulation	0.20	≥ 0.30
Stimulation	0.75	≥ 1.00

Table 2. Diagnostic test of autoimmune disease

Antibody	Value
Anti-SS-A/Ro	negative
Anti-SS-B/La	negative
Anti-DNA screening	negative
Rheumatoid factor quantitation	less than 20 IU/ml

Table 3. Comparison of previous reports about sialodochitis

	Shimada T, et al ²⁾	Chikamatsu K, et al ³⁾	Darling MR, et al ⁴⁾	Pollak N, et al ⁵⁾
Age / Sex	50 / F	Case1 : 60 / F Case2 : 58 / F	34 / F	34 / F
Clinical finding	10-years history of swelling of the left cheek during and after meals. Decreased salivary secretion. Mucous saliva.	Recurring swelling of both parotid glands and secretion of mucous plugs containing eosinophils during several decades	1-year history of intermittent pain and swelling in the right submandibular gland region. Worsened with meals. Decreased salivary secretion.	gradually worsening episodic swelling and painful parotitis of 2-years duration unresponsive to antibiotics or systemic steroids.
Histopathologic finding	Smear of the saliva in the parotid duct with Hansel staining demonstrates red eosinophils.	Duct thickening and infiltration of lymphocytes and eosinophils in to the stroma surrounding the duct.	Periductal sclerosis with a surrounding dense lymphoplasmacytic infiltration and blood vessel proliferation The intense eosinophilic component of the periductal infiltration.	squamous metaplasia of major ducts with marked periductal fibrosis, acute and chronic inflammation, with lymphoid follicles and a high proportion of eosinophils
Allergy history	Bronchial asthma and allergic rhinitis	Case1 : none Case2 : allergic rhinitis	Not described	None
Affected site	Unilateral parotid gland	Bilateral parotid glands	Bilateral submandibular glands	Unilateral parotid gland
Diagnosis	Fibrinous sialodochitis	Sialodochitis fibrinosa	Chronic sialodochitis with eosinophilia	Sialodochitis with eosinophilic inflammation
Treatment	Drainage operation	Massage to compress salivary glands	Sialodochoplasty. Finally, submandibular gland excision after bilateral recurring	Superficial parotidectomy

F : female

II. 증례 보고

57세의 여자가 우측 이하선 부위의 간헐적인 종창을 주

소로 연세대학교 치과대학병원 구강악안면외과에 내원하였다. 환자는 5년 전부터 식사 중 저작을 하거나 신 음식을 먹을 경우 우측 이하선 부위가 부어 올랐다가 가라앉

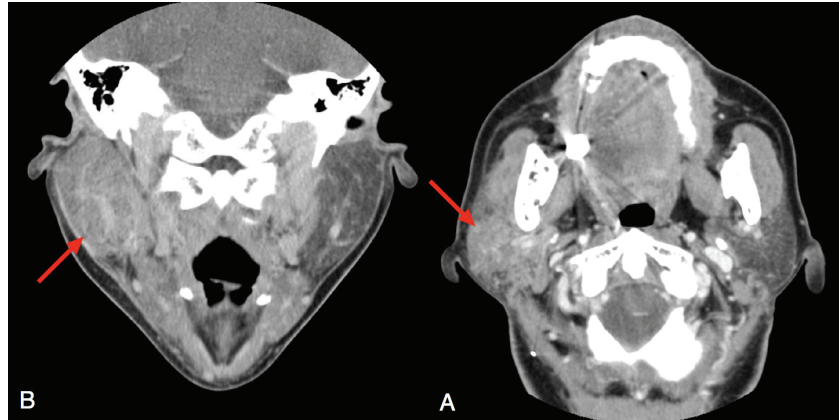


Fig. 1 Preoperative CT scan, **A**: Axial view, **B**: Coronal view. The size and density of right parotid gland is increased. But, there is no evidence of calcified material (arrows: lesions).

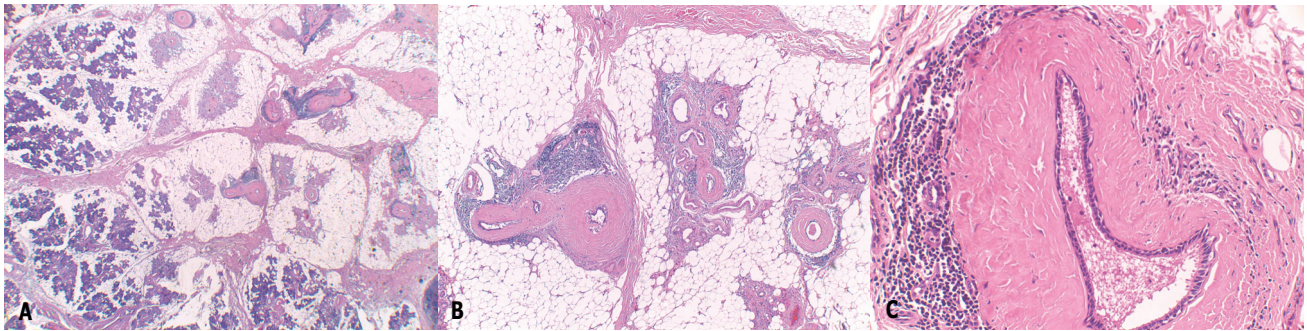


Fig. 2 **A**: Microscopic examination showed atrophic parotid gland acini with fatty infiltration (H-E stain, $\times 10$). **B**: The ductal elements showed concentric fibrosis and lymphocytic infiltration (H-E stain, $\times 40$). **C**: The dense fibrotic interlobular ductal wall was infiltrated by lymphocytes (H-E stain, $\times 200$).

는 증상이 반복되었고, 특별한 처치 없이 지내던 중 내원하기 일주일 전부터 증상의 빈도가 증가하였다. 환자는 고혈압 및 당뇨 병력으로 Angiotensin II receptor antagonist, HMG-CoA reductase inhibitor, Biguanides를 복용하고 있었다. 타액분비는 감소되어 있었고(Table 1), 컴퓨터 단층 촬영 결과 반대측에 비하여 우측 이하선의 크기 및 밀도가 증가되어 있었지만, 이하선 내부나 이하선 도관 부위에 석회화된 물질은 관찰되지 않았다(Fig. 1). 자가면역질환을 감별하기 위한 검사에서는 모두 음성 반응을 보였다(Table 2). 만성 이하선염으로 진단하고 2010년 6월 전신마취하 이하선 천엽 절제술(Superficial parotidectomy)을 시행하였다.

III. 고찰

포괄적인 의미로 재발성 만성 타액선염의 원인은 주로 구강으로부터의 감염 또는 타석에 의한 폐쇄적인 환경으로 인해 발생하는 것으로 알려져 있다¹⁾. 타액선 도관에 염증이 있는 경우에는 대부분 타액선염이 동반되어 있으므로 타액선염(Sialoadenitis)으로 명명해 왔지만, 본 증례에서는 도관의 단독적인 비후성 섬유화 및 염증 소견이 분명하고 이하선 실질조직에서는 염증상을 관찰할 수 없었기 때문에 타액선 도관염(Sialodochitis)으로 구분하여 명명할 필요가 있었다.

타액선 도관염을 보고한 일부 문헌²⁻⁴⁾에서는 섬유소성 타액선 도관염(Fibrinous sialodochitis) 등의 표현을 사용하였는데, 임상적 특징과 조직병리학적인 소견을 비교해 보았을 때(Table 3), 본원에서 경험한 만성 타액선 도관염(Chronic sialodochitis)과 같은 질환으로 사료된다.

만성 타액선 도관염(Chronic sialodochitis)의 병인은 명확히 밝혀지지는 않았지만, 여러 보고에서 알러지와 연관성을 강조하고 있다²⁻⁵⁾. Shimada 등²⁾은 증례보고를 통하여 타액선 도관염의 원인이 점액성 타액이나, 타액선 도관의 낭성 확장이나 천식이나 알러지성 비염의 과거력과 연관이 있다고 기술하였다. Chikamatsu 등³⁾은 양측성 섬유성 타액선 도관염의 2증례를 보고하였는데, 이 중 한 증례는 알러지와 연관성이 있었지만, 다른 한 증례는 알러지와 연관성이 없었고, Eroupean academy of allergology and clinical immunology(EAACI)에서 과민반응을 알러지성 과민반응과 비알러지성 과민반응으로 분류해야 한다고 제안⁶⁾한 것을 근거로 타액선 도관염을 알러지성과 비알러지성으로 세부 분류할 필요성이 있다고 언급하였다.

본 증례의 경우, 환자의 과거력에서 약 30년 전에 일시적으로 턱복숭아 알러지를 겪었다는 것 외에 알러지와 특별한 연관성을 찾기는 어려웠으며, 현재 환자가 복용중인 약제들도 알러지 반응을 일으킬 가능성은 매우 낮았다. 수술전 혈액검사 결과 호산성 백혈구의 양은 정상수치였으며, 자가면역질환을 감별하기 위한 검사에서도 음성반응을 보였다(Table 2). 타액선의 분비는 정상에 비하여 저하된 양상을 보였다(Table 1).

검체의 조직학적 소견에서, 타액선 내부 실질 조직은 위축되어 있었고 지방 세포 조직으로 대체되어 있었다. 섬유성으로 두꺼워진 도관주위에 림프구의 침윤 소견을 보였으며, 타액선 실질의 염증 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 2).

이상의 소견에서, 본 증례는 원인 불명의 비알러지성 과민반응으로 인하여 발생한 비알러지성 타액선 도관염(Non-allergic sialodochitis)으로 추측된다.

Darling 등⁴⁾은 양측 악하선에 발생한 만성 타액선 도관염을 보고하였는데, 조직학적인 양상이 Kimura 병 또는 angiolymphoid hyperplasia with eosinophils (ALHE)와 유사하므로 감별이 필요하다고 하였다. Kimura병은 도관주위의 섬유화 및 림프구성 침윤 등의 조직학적 양상이 타액선도관염과 매우 유사하지만, 동반되는 신장질환 등의 임상적 증상으로 감별할 수 있으며, ALHE는 도관주위의 섬유화를 보이지 않는 것으로 감별이 가능하다.

IV. 요약

비알러지성 만성 타액선 도관염(Non-allergic chronic sialodochitis)은 타액선 실질의 염증 소견 없이 타액선 도관에만 염증상을 보이는 질환으로 영문 문헌에 5례만 보고되어 있는 매우 드문 질환이기에 보고한다.

V. 참고문헌

1. Motamed M, Laugharne D, Bradley PJ: Management of chronic parotitis: a review. *J Laryngol Otol* 2003; 117:521-526.
2. Shimada T, Okano H, Hisa Y: A case of severe dilatation of the parotid duct due to fibrinous sialodochitis. *Acta Otolaryngol* 2006; 126:1112-1114.
3. Chikamatsu K, Shino M, Fukuda Y, et al: Recurring bilateral parotid gland swelling: two cases of sialodochitis fibrinosa. *J Laryngol Otol* 2006; 120:330-333.
4. Darling MR, Phillips VM, Erasmus JH: Bilateral submandibular salivary gland swelling—a report of chronic sialodochitis with eosinophilia. *SADJ* 2002; 57:104-106.
5. Pollak N, Templer JW, Esebua M, et al: Episodic painful parotid swelling caused by sialodochitis with eosinophilic inflammation: a new entity. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2009; 140:132-133.
6. Johansson SG, Hourihane JO, Bousquet J, et al: A revised nomenclature for allergy. An EAACI position statement from the EAACI nomenclature task force. *Allergy* 2001; 56:813-824.